甲状舌管乳头状癌一例并文献复习

代国锋[1]， 王钢普[1]，李淑亚[2]，尹立强[3]

[1]济南市第四人民医院，甲状腺乳腺外科，济南 250000

[2] 济南市第四人民医院，重症医学科，济南 250000

[3]济南市第四人民医院，病理科，济南 250000

通讯作者：王钢普,电话：0531-81313102，电子邮箱：wangfu@163.com

摘要：甲状舌管囊肿是一种临床常见疾病，而甲状舌管囊肿合并囊壁癌变非常罕见，本文是一例甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌病例，切除甲状舌管囊肿术后病理结合免疫组化考虑甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌。对此病例进行分析及相关知识学习，结合患者临床资料、病理特征探讨甲状舌骨囊肿与甲状腺乳头状癌的关系。

关键词：甲状舌管囊肿；甲状腺乳头状癌；临床表现；病理特征

Thyroglossal duct papillary carcinoma: a case report and comprehensive literature review.

DAI Guofeng[1], Wang Gangpu[1], LI Shuya[2], Yin Liqiang[3]

[1] Department of Thyroid and Breast Surgery, [2]Department of Critical Care Medicine, [3] Department of Pathology ,the Fourth People's Hospital of Jinan, Jinan 250000, China

Corresponding author: WANG Gangpu, Tel: 0531-81313102, E-mail: wangfu@163.com

Abstract: The thyroglossal duct cyst is a frequently encountered clinical condition; however, the coexistence of cystic wall cancer with it is exceptionally uncommon. This case underscores an occurrence of papillary thyroid carcinoma complicating a thyroglossal duct cyst. Postoperative pathology and immunohistochemistry were meticulously examined to delineate the unique attributes of this dual condition. Through a comprehensive analysis of this case, in conjunction with pertinent medical knowledge and a thorough review of the patient's clinical data and pathological characteristics, our objective was to explore the connection between thyroglossal duct cysts and thyroid papillary carcinoma.

Key words: Thyroglossal duct cyst; Thyroid papillary carcinoma; Clinical manifestations; Pathological features

甲状舌管囊肿是先天性颈部肿物中最为常见的一种疾病，主要是甲状舌管闭塞不全所致，而甲状舌管囊肿同时伴有甲状腺乳头状癌非常罕见，容易导致漏诊漏治甚至误诊，本例患者术中病理为（颈部）符合甲状舌骨囊肿，部分滤泡上皮伴乳头状增生，术后病理结合免疫组化：CK19（+）、Galetin-3 部分（+）、CD56（部分弱+）、CyclinD1（+）、TPO 部分（+），Ki-67 阳性率约 5%，考虑甲状舌管囊肿，局灶囊壁查见甲状腺乳头状癌，现将其报道如下

临床资料

患者女性，76 岁，主因“发现颈部肿物 1 月” 入院，入院查体：颈部对称，气管居中，颈前正中舌骨下方可触及一约 2×2×1.5cm 肿物，质地软，边界清楚，表面光滑，无压痛，吞咽时随舌骨上下活动，左右活动差，双侧甲状腺未触及肿物，颈部未触及肿大淋巴结。颈部浅表器官 B 超：甲状舌骨前方探及大小约 2.2×1.9×1.7cm 的囊实性包块回声，边界清，内透声欠佳，内可见强回声。CDFI：内未探及明显血流信号显示。超声提示：甲状舌骨管囊肿（图 1）。甲状腺 B 超：甲状腺腺体内探及多个结节回声，部分结节内可见强回声，较大者位于左叶大小约 2.7×1.9cm，为囊实性结节，边界清楚，囊性部分内透声欠佳，实性部分内回声不均质，双侧颈部为见肿大淋巴结回声。超声提示：甲状腺多

发结节（TI-RADS3 级），颈部 CT 诊断：颈部前正中线区占位，考虑甲状舌骨囊肿可能性大（图 2）。初步诊断：颈部肿物 甲状舌骨囊肿可能性大，排除手术禁忌，在全麻下行颈部肿物切除术，术中见舌骨下约 2 cm×2 cm×2 cm 肿物，呈囊性，边界清楚，游离肿物见上方一细条索状物与舌根相连，完整切除肿物并行舌骨离断术。术中快速病理提示：(颈部）符合甲状舌骨囊肿，部分滤泡上皮伴乳头状增生，术后病理低倍视野可见囊壁内甲状腺滤泡成分，囊腔内衬单层柱状细胞，囊腔内可见较多具有纤维血管轴心的分枝状乳头和滤泡样结构，浸润于富于胶原的间质中（图 3，4），可见沙砾体（图 5）。高倍视野可见毛玻璃样核，细胞核增大，拥挤、重叠，可见核沟及个别核分裂象（图 6）。病理结果回报：(颈部）甲状舌骨囊肿，局灶囊壁内滤泡上皮伴乳头状非典型增生，结合免疫组化符合甲状腺乳头状癌（图 3）。免疫组化：CK19（+）、Galetin-3 部分（+）、CD56（部分弱+）、CyclinD1（+）、TPO 部分（+），Ki-67 阳性率约 5%（图 7，8）。患者痊愈出院，嘱患者定期复查，随诊半年未见肿瘤复发及远处复发征象。





图 1 B 超示实性成分及钙化灶

图 2 示肿物内有高密度钙化影

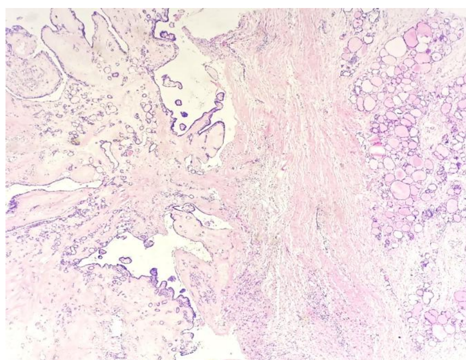


图 3 HE×40 倍

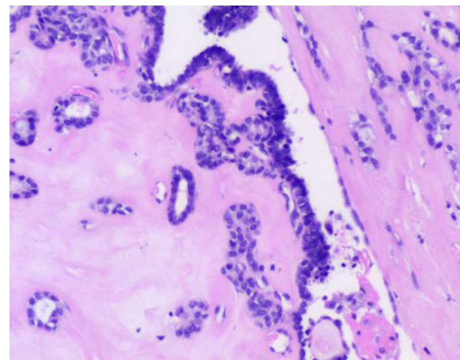


图 4 HE×100 倍， 见囊壁单层细胞及乳头癌成分

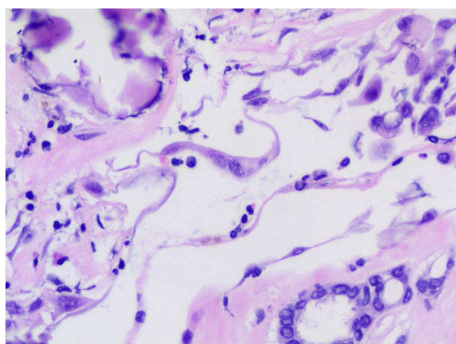


图 5 HE×200 倍，可见砂砾体

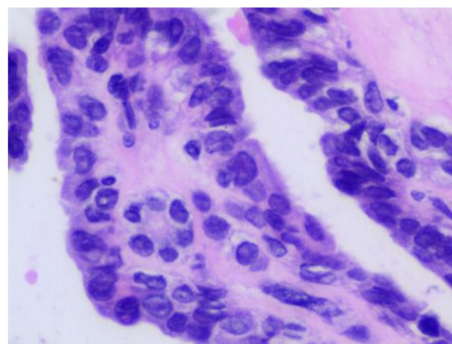
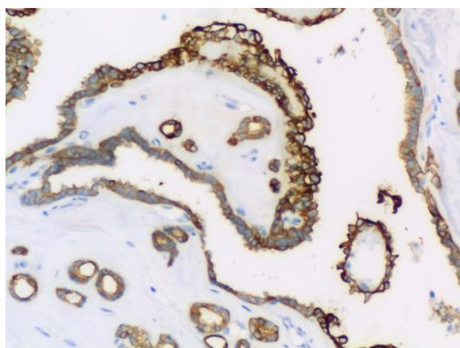


图 6 HE×400 倍，见核内假包涵体及核沟



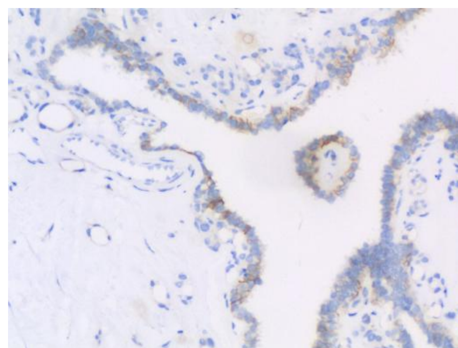


图 7 IHC×200 倍，瘤细胞 CK19 (+)　EnVision 法

图 8 IHC×200 倍，瘤细胞 CD 56 弱 (+) EnVision 法

讨论

甲状舌管囊肿多为甲状腺先天性异常所致[1]，在胚胎发育过程中，甲状腺从舌根盲孔区下降至分娩后甲状腺位置，下降过程中形成甲状舌管，其在妊娠的 7-10 周闭塞，如果未能闭锁退化，可扩张导致甲状舌管囊肿。61%的囊肿位于舌骨水平或舌骨与甲状软骨之间，24%发生在舌骨上，13%发生在胸骨上，2%发生在舌内。甲状舌管囊肿的恶变率低，一般为 1%[2]。最常见的病理类型为乳头状癌约占 75%-80%，乳头状－滤泡状混合性癌占 7%，鳞状细胞癌占 5%，滤泡癌占 1.7%、未分化癌和 Hurthle 细胞癌占 0.9%等[3]。Bretano 等在 1911 年报道了首例甲状舌管囊肿癌变病例，目前国内外共报道该病例约 300 余例[4]，该疾病可以在各年龄段发病，均有所报道，平均年龄为 39 岁，女性与男性的发病比率比例约 2：1 [5]。

甲状舌管囊肿癌变病理类型大多数为甲状腺乳头状癌，滤泡性甲状腺乳头状癌占小一部分，而鳞状细胞癌非常罕见[6]。目前绝大部分学者认为甲状舌管癌为原发于甲状舌管的恶性肿瘤，乳头状及滤泡状癌起源于甲状舌管内残留的甲状腺组织，而鳞状细胞癌起源于囊壁鳞状上皮组织。少数作者认为甲状舌管癌是隐匿性甲状腺癌转移至甲状舌管所致[7]。与此同时也不能排除异位甲

状腺恶变的可能，异位甲状腺组织是在胚胎发育期受到干扰而偏离正常甲状腺位置且发病罕见[8]。

甲状舌管囊肿和甲状舌管囊肿癌变的临床症状相似，除非肿瘤质地硬，触之不规则，活动度差，生长迅速或伴有淋巴引流区域癌转移，才会考虑甲状舌管囊肿癌变可能，否认术前两种疾病难以鉴别，大多数是根据术后病理诊断明确。Widstrom 等[9]阐述了甲状舌管囊肿癌变的诊断标准：①.囊壁内有甲状舌管残迹，散在的甲状腺滤泡，囊内壁衬有鳞状上皮和纤毛柱状上皮；②癌肿位于甲状舌管部位或甲状舌管囊肿内；③原甲状腺部位未见癌组织浸润。

在临床诊断考虑甲状舌管囊肿的患者行 B 超检查时，首先应明确颈部肿物所在位置，然后探查与之有无相连的管状无回声或低回声结构(即甲状舌管回声)。超声检查发现囊肿与管状结构相连甚至穿过舌骨中段达口底，甲状舌管囊肿诊断初步成立，但定性仍较困难，有待病理进一步确定。超声所见囊肿边界清楚位置固定，不能向上及左右推移，随吞咽或伸舌时可见肿块向上移动为其特征[10]，而甲状舌管囊肿发生癌变的超声表现为颈部正中的囊实性回声，实性部位附着在囊壁的一侧，伴有微小钙化灶，彩色多普勒超声可探及实性结节的血流信号，如颈部淋巴结有癌转移则可出现淋巴结增大、正常结构消失，皮质和髓质结构破坏、

血流信号丰富、沙粒体钙化等相应异常表现[11]。良性的甲状舌管囊肿 CT 表现为低密度病灶，CT 值略高于水，Branstetter 等研究指出如果甲状舌管囊肿内出现壁结节或者钙化或两者同时出现，就应考虑甲状舌管囊肿癌变[12]，至今还没有良性甲状舌管囊肿及其慢性炎症中发现钙化的报道，钙化应该是乳头状癌的特异性影像学征象[13]。

结合本例患者术前查的颈部浅表B超超声检查，未见甲状舌管囊肿癌变超声检查下典型的血流信号及其微小钙化的恶性征象，未考虑到甲状舌管囊肿癌变可能，患者术前行颈部CT描述提示甲状软骨水平、颈部前正中线区可见一类圆形薄壁囊性低密度灶，边界清楚，密度均匀，边缘及其可见多发钙化，我们忽视了CT图像中钙化的特异性的影像学征象，未进行术前超声引导下细针细胞学抽吸活检，它是术前怀疑甲状舌管囊肿癌变最常用的检查方式，但准确率低，大约为53%，易漏诊[14-15]，需在B超引导下囊肿内的实性成分及微小钙化灶反复抽吸提高准确率。一些学者认为甲状腺核素显像可作为异位甲状腺及相关疾病的首选检查方法，与B超引导下细针穿刺活检相结合可提高诊断率[16]，Bakkar等[17]对回顾了15例甲状舌管乳头状癌患者，研究发现术前通过B超引导下行甲状腺细针穿刺可以对甲状舌管乳头状癌进行前期诊断，同时术前行BRAF V600E的检测可以明确其手术方式，如果BRA FV600E阳性，肿瘤向周围外侵风险高，需要进行全甲状腺切除及进行放射碘治疗。大多数甲状舌管囊肿癌限

于囊肿内，有时会有包膜侵犯的报道，淋巴结转移率在7%～15%，远处转移很少见[18]，一些专家不建议甲状腺尚正常的甲状舌管囊肿癌低风险组（年龄15～45岁,无放疗史，直径小于4cm，无软组织侵袭或远处转移）接受甲状腺全切除术，不推荐常规选择性淋巴结清扫术[19]，而高风险组（年龄≥45岁，有放疗史，肿物直径≥4cm,合并甲状腺肿瘤或伴有淋巴结和远处脏器转移转移者应行Sistrunk手术加TT和术后放射性碘治疗，必要时需行区域性颈淋巴清扫术[20]。PATEL等[21]回顾性分析了62例甲状舌管囊肿癌患者，研究表明，大多数情况下Sistrunk手术范围足够适用，全甲状腺切除术及选择性淋巴结清扫术并未让患者预后受益。对异位甲状腺癌已经确诊的患者，是否需要甲状腺全切除术及颈部淋巴结清扫术，需要个体化精准评估。该患者术后病理结合免疫组化提示（颈部）甲状舌骨囊肿，局灶囊壁内滤泡上皮伴乳头状非典型增生，结合免疫组化符合甲状腺乳头状癌。结合患者病史，术前甲状腺B超、颈胸部CT及术后病理情况属于低风险组未进行二次手术，告知患者定期复查，随诊半年未见肿瘤复发及远处转移。

综上所述，当临床初步诊断为甲状舌管囊肿时应考虑到甲状舌管囊肿合并癌变可能，术前应详尽完善相关检查，甲状腺B超、颈部浅表器官超声、颈部淋巴结超声、颈部增强CT等，如患者超声囊实性包块、血流信号及其微小钙化的恶性征象，CT中壁结节或者钙化或两者同时出现征象，建议在B超引导下行甲状舌管囊肿及异

常淋巴结的细针穿刺活检及甲状腺核素显像，提高术前诊断准确率，必要时行BRAF V600E，术中根据快速病理结果决定手术方案，术后依照病理结果全程科学规范治疗，目前有关甲状舌管囊肿合并甲状腺癌的病例报道仍然较少，其诊疗共识仍未达成统一，需要积累大宗病例进一步进行探讨。

参考文献

[1] 郭万宏, 唐建勇，何端军. 甲状舌管囊肿伴甲状腺癌1例［J］. 中国耳鼻咽喉颅底外科杂志, 2015, 21(04): 345.

[2] Plaza CP, Lopez ME,Carrasco CE,et al.Management of well-differentiated thyroglossal remnant thyroid carcinoma: time to close the debate? Report of five new cases and proposal of a definitive algorithm for treatment［J］. Ann Surg Oncol, 2006,13(5): 745-752.

[3] Alatsakis M, Drogouti M, Tsompanidou C,et al.Invasive Thyroglossal Duct Cyst Papillary Carcinoma: A Case Report and Review of the Literature［J］. Am J Case Rep, 2018, (19): 757-762.

[4] 王松祥,黄黎明.甲状舌管乳头状癌一例［J］. 中华耳鼻咽喉头颈外科杂志，2019, 54(7):548-549.

[5] Sanz-Martin B, Aguillo-Gutierrez E, Roman-Gimeno S, et al. Case report: Thyroglossal duct cyst papillary carcinoma in a young male[J]. Ann Endocrinol (Paris), 2021, 82(2): 126-128.

[6] Patel SG, Escrig M, Shaha AR,et al.Management of well-differentiated thyroid carcinoma presenting within a thyroglossal duct cystcJ Surg Oncol, 2002, 79(3): 134-139,140-141.

[7] 祝海颖, 李萍，刘艾蓓, 等.甲状舌管囊肿及其癌变的超声图像与病理对照的研究［J］. 中国超声医学杂志, 2021,37(02): 132-134.

[8] 覃扬达，梁建平, 朱习平，等. 颈部异位甲状腺肿瘤误诊为甲状舌管囊肿［J］. 中国耳鼻咽喉头颈外科, 2005(06): 344.

[9] Widstrom A, Magnusson P, Hallberg O, et al. Adenocarcinoma originating in the thyroglossal duct［J］. Ann Otol Rhinol Laryngol, 1976,85(2 pt.1): 286-290.

[10] 邓美玲, 陈冬军, 张成生.甲状舌骨囊肿超声表现分析［J］. 中华医学超声杂志(电子版), 2013, 10(02): 122.

[11] 杨惋婷, 马步云.甲状舌管癌的超声表现1例［J］. 中国临床医学影像杂志, 2022,33(11): 823.

[12] Branstetter BF, Weissman JL, Kennedy TL,et al. The CT appearance of thyroglossal duct carcinoma［J］. AJNR Am J Neuroradiol, 2000, 21(8): 1547-1550.

[13] Glastonbury CM, Davidson HC, Haller JR ,et al.The CT and MR imaging features of carcinoma arising in thyroglossal duct remnants［J］. AJNR Am J Neuroradiol, 2000, 21(4): 770-774.

[14]Gwiezdzinska Klubo, Manes RP, Chia SH,et al.Clinical review: Ectopic cervical thyroid carcinoma--review of the literature with illustrative case series［J］. J Clin Endocrinol Metab, 2011,96(9): 2684-2691.

[15]Aculate NR,Jones HB,Bansal A,et al Papillary carcinoma within a thyroglossal duct cyst:significance of a central solid component on ultrasound imaging [J] . Bri J Oral Maxillofaci Surg,2014, 52(3):277－278 .

[16]蒋宁一. 核素显像在甲状腺疾病诊断中的应用［J］. 中国临床医学影像杂志, 2008, (10) :730-732.

[17]Bakkar S,Macerola E,Aljarrah Q,et al. BRAF V600E mutation:a potential predictor of more than a Sistrunk’s procedure in patients with

thyroglossal duct cyst carcinoma and a normal thyroid gland ［J］ . Updates Surg,2019,71(4):701 －704 .

[18] Pellegriti G, Lumera G, Malandrino P,et al.Thyroid cancer in thyroglossal duct cysts requires a specific approach due to its unpredictable extension［J］. J Clin Endocrinol Metab, 2013,98(2): 458-465.

[19] 叶玮鹏，黄丽涵，林荣辉, 等. 罕见的异位甲状腺癌误诊为甲状舌管囊肿1例［J］. 临床普外科电子杂志, 2023, 11(02): 37-40.

[20] 周娇, 黄琼玲，鲁明, 等. 甲状舌管乳头状癌1例［J］. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2023, 37(06): 491-493.

[21] PATEL SG,ESCRIG M,SHAHA AR,et al..Management of well-differentiated thyroid carcinoma presenting within a thyroglossal duct cyst [J]. J Surg Oncol, 2002, 79(3): 134-141.